

[臨床]

單骨性線維性骨異形成症の1例

—— 骨シンチグラフィーによる鑑別を中心に ——

金子 昌幸, 高野 英明, 笥 弘毅,
田岡 賢二,* 池田 博人,* 輪島 隆博*

東日本学園大学歯学部歯科放射線学講座

*東日本学園大学歯学部附属病院放射線部

(主任: 笥 弘毅 教授)

* (部長: 笥 弘毅 教授)

Monostotic Fibrous Dysplasia Differentiated by
Bone Scintigraphy

Masayuki KANEKO, Hideaki TAKANO, Hirotake KAKEHI,
Kenji TAOKA,* Hiroto IKEDA,* and Takahiro WAJIMA*

Department of Dental Radiology, School of Dentistry,
HIGASHI-NIPPON-GAKUEN UNIVERSITY

*Division of Radiology, Dental Hospital of
HIGASHI-NIPPON-GAKUEN UNIVERSITY

(Chief: Prof. Hirotake KAKEHI)

* (Head: Prof. Hirotake KAKEHI)

Abstract

A case of monostotic fibrous dysplasia observed in the right maxilla was reported mainly from the standpoint of the radiographic findings and the scintigraphic ones.

In addition, differential diagnosis with the bone scintigraphy was discussed.

Results obtained were as follows;

- 1) Radiographic and scintigraphic diagnosis obtained was "monostotic fibrous dysplasia" in the maxilla.
- 2) Bone scintigraphy was highly useful in the diagnosis of this disease to be monostotic or polyostotic.
- 3) In surveying early changes of the whole body skeleton, bone scintigraphy was more useful than traditional radiography.

Key words : Bone scintigraphy, monostotic fibrous dysplasia, polyostotic fibrous dysplasia

受付: 昭和58年3月31日

本論文の要旨は第2回東日本学園大学歯学会総会(昭和58年3月)において発表した。

はじめに

顎顔面領域の変形を主徴とする病変のひとつに、線維性骨異形成症 (fibrous dysplasia) が挙げられる。本症は、皮膚の色素沈着と性的早熟を伴うアルブライト症候群 (Albright's syndrome), 全身の骨疾患の一症状として発現する多骨性線維性骨異形成症 (polyostotic fibrous dysplasia) および限局した一部の骨のみに現れる単骨性線維性骨異形成症 (monostotic fibrous dysplasia) の3型に分類することができる¹⁾。これらの放射線学的鑑別は、従来、全身的なX線検査に依存することが主であったが、X線検査のみでは、初期病変の診断が不可能なことが多々認められる^{2,3)}。一方、近年の核医学の著しい発達は歯学領域にもおよび、X線検査よりも、より早期の診断が可能となった^{2,4)}。

今回、われわれは、上顎骨に認められた線維性骨異形成症の1例につき、X線検査および核医学検査の結果、単骨性線維性骨異形成症であるとの診断を得た症例を経験したので、X線所見およびシンチグラム所見を中心に供覧するとともに、放射線学的鑑別診断について簡単な考察を加えて報告する。

症 例

患者：K. S, 27才 男性

初診：昭和57年1月7日

主訴：右側上顎骨の膨隆による顔貌の左右非対称性

家族歴：特記事項なし

全身既往歴：特記事項なし

現病歴：約2年前より、右側上顎骨の膨隆と顔貌の左右非対称性を自覚するも、疼痛や咀嚼障害を認めないために放置していたとのことである。昭和56年8月、他歯の齲蝕治療の目的で某歯科医院を受診した際、該部の膨隆の精査を

受けるように勧められ、昭和57年1月7日、本学附属病院放射線科を訪れたものである。

現症：全身的所見としては、体格および栄養状態ともに中等度であり、異常は特に認められない。顔貌所見としては、右側外頬部の膨隆が中等度に認められ、左右非対称性を呈する。口腔内所見としては、右側上顎臼歯部に、口蓋側から頬側にわたる鶏卵大の膨隆が認められる。該部は、触診により骨様硬固物を触知する。病変の境界は比較的明瞭であり、歯牙の動揺や打診痛は認められず、周囲歯肉は健康色を呈する。なお、5は欠損状態であるが、⑥5④のブリッジにて補綴処置が成されている。支台となる64を除き生活歯である。

X線所見：歯科用X線所見、咬合法X線所見、オルソパントモグラム所見および頭頸部X線所見では、2から7にかけて、上顎洞から歯槽頂にわたる比較的境界明瞭なスリガラス様のX線不透過像が認められる。その他の骨には異常所見は認められない (Fig. 1)。

断層X線所見では、2から7にかけて、上顎洞から歯槽頂にわたるスリガラス様のX線不透過像が認められる。病変の境界は比較的明瞭で、一部は上顎洞内への膨隆が認められる。しかし、病変は上顎骨に限局しており、その他の骨の異常は認められない (Fig. 2)。

骨シンチグラム所見：正面像では、2から7にかけて、上顎洞から歯槽頂部にわたる、鶏卵大の強い^{99m}Tc-MDPの集積を認める。側面像では、上顎洞部から歯槽頂部にかけて^{99m}Tc-MDPの強い集積を認める。正面像および側面像ともに、病変の境界は明瞭である (Fig. 3)。

一方、全身シンチグラフィーで行なった全身の骨格系の検査では、何らの異常所見は認められない (Fig. 4)。

臨床検査所見：臨床検査成績は Table 1 に示すごとくである。血清 Ca, P, ALP の値に異常は認められない。

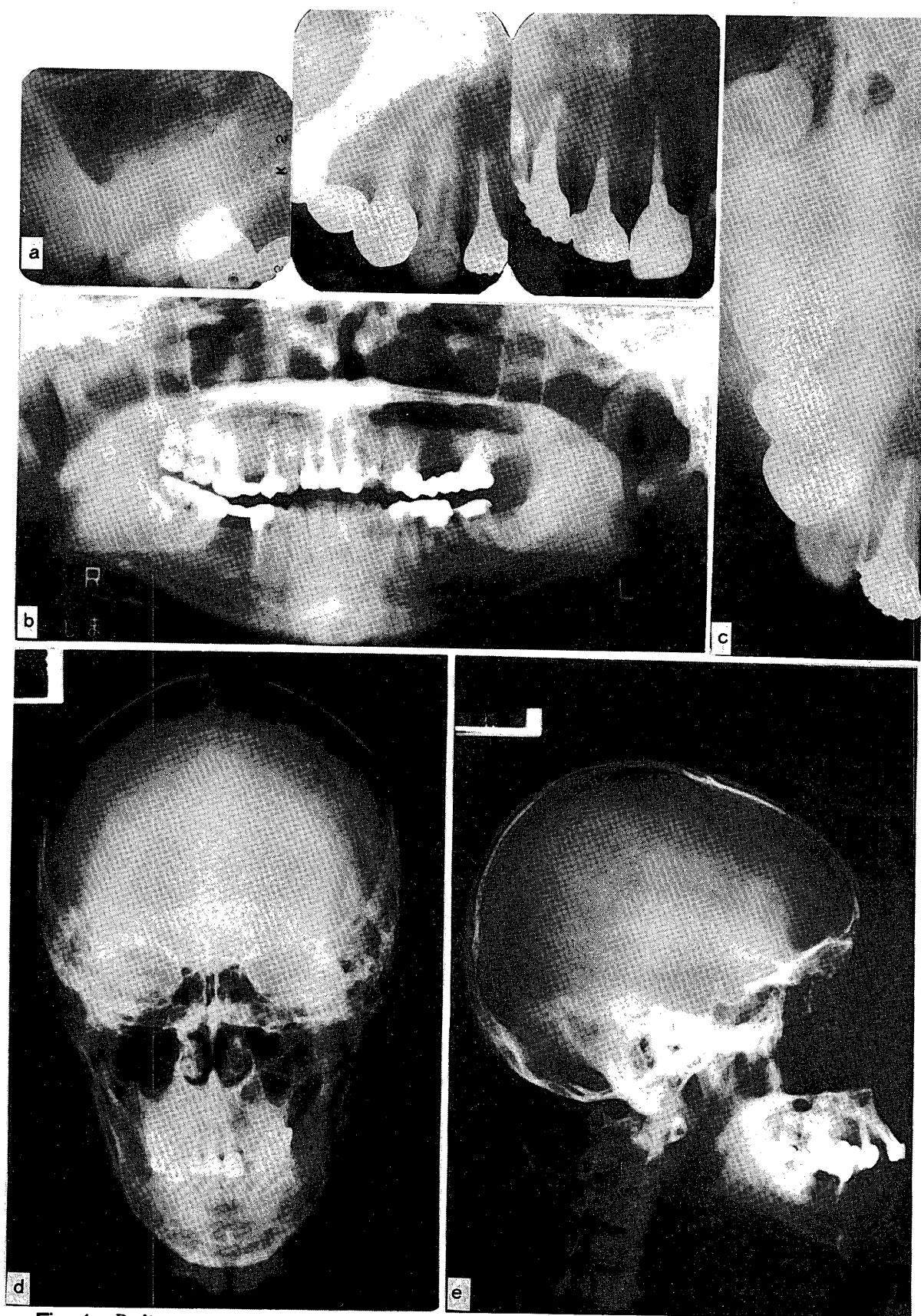


Fig. 1 Radiographs of "Monostotic Fibrous Dysplasia"
 (a: Dental radiograms, b: Orthopantomogram, c: Occlusal radiogram,
 d: Posterior-Anterior view of maxillo-facial region, e: Right lateral view of maxillo-facial region)

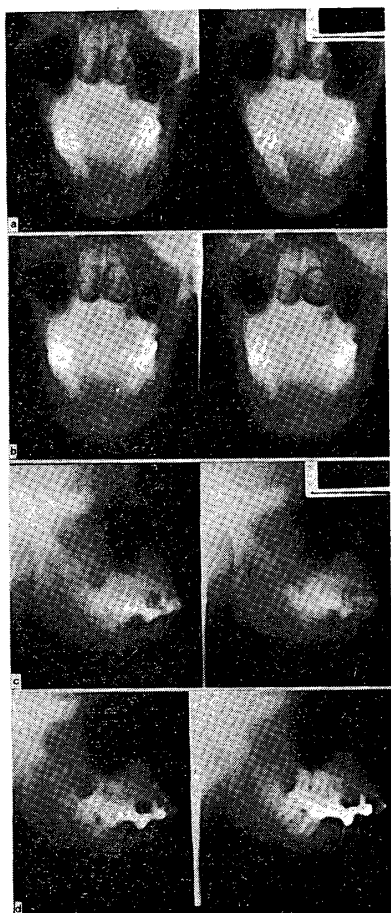


Fig. 2 Tomograms of maxillo-facial region
(a: 15.5cm and 16.0 cm, b: 15.0cm and 14.5cm, c: 13.5cm and 14.0cm, d: 13.0cm and 12.5cm)

診断：以上の検査結果から，本症例は単骨性線維性骨異形成症であるとの診断を得た。

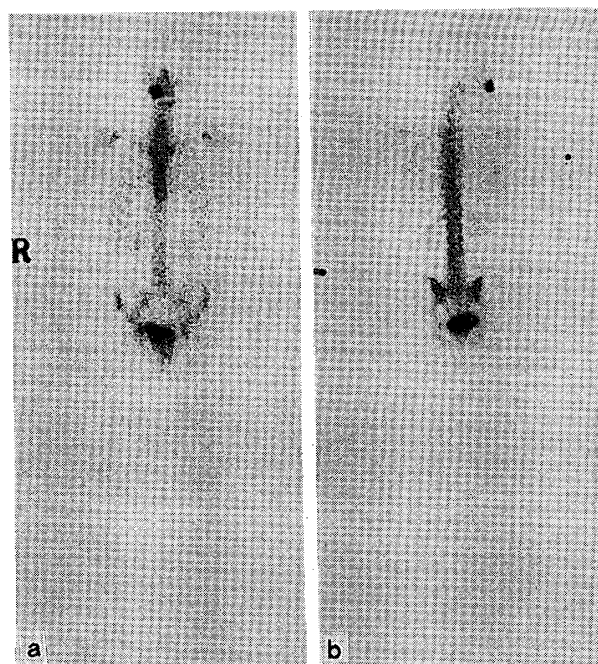


Fig. 4 Scintigrams of whole body skeleton (a: Anterior, b: Posterior)

処置ならびに経過：本症例においては，病変の発育が極めて緩慢であり，かつ，顔貌の左右非対称性以外，何らの機能障害も認めないため，しばらくの間，経過を観察することとした。将来，機能障害等の症状が著しく現われたときには，口腔外科的処置を必要とするものと考えられる。

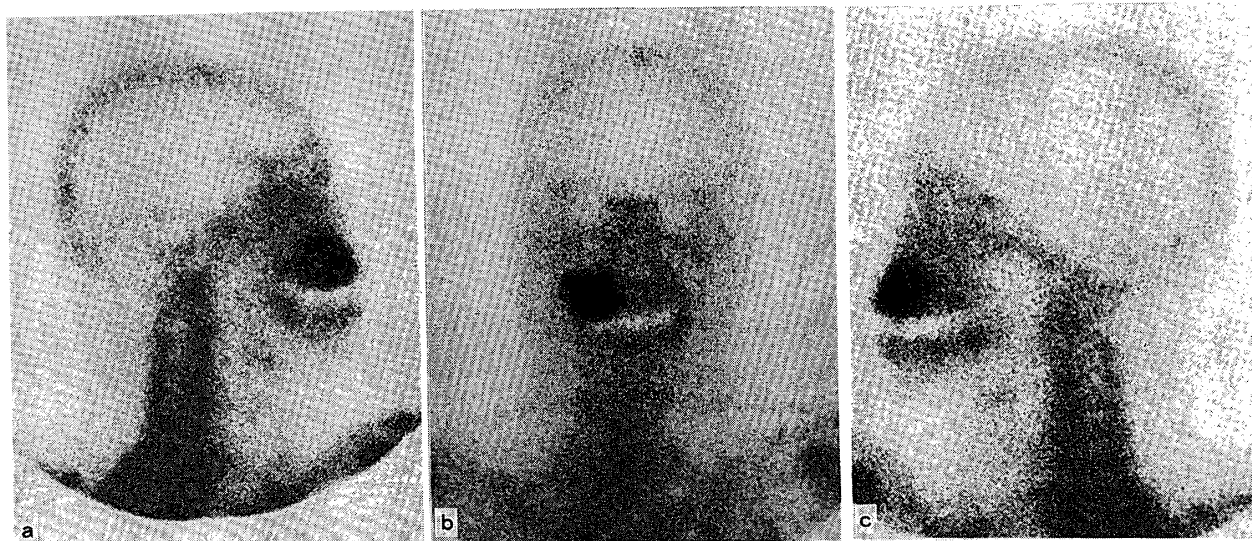


Fig. 3 Scintigrams of maxillo-facial region
(a: Right lateral, b: Anterior, c: Left lateral)

Table 1 Clinical Tests

RBC	$5.4 \times 10^6 / \text{mm}^3$
WBC	$5.8 \times 10^3 / \text{mm}^3$
Bas.	0%
Eos.	1%
St.	2%
Seg.	41%
Lym.	53%
Mon.	3%
Thrombocyte	$16.0 \times 10^4 / \text{mm}^3$
Hgb	16.6g/dl
Hct	48.0%
Calcium	5.1mEq/l
Phosphorus	3.5m/dl
ALP	62.5u/ml

考 察

顎骨に認められる線維性骨異形成症の特徴的なX線所見は、均一の、いわゆる ground glass appearance (スリガラス様所見) や granular appearance (顆粒様所見) と呼ばれるX線不透過像として認められることが多い^{1,5)}。境界は、周囲の骨組織へび慢性に移行するものが多いと言われているが⁵⁾、本症例のごとく、境界が比較的明瞭なこともある。一般に、歯牙の転位や離開あるいは歯根の吸収等をきたすことは稀である。鑑別を要する類似疾患として化骨性線維腫 (ossifying fibroma) が挙げられるが、化骨性線維腫は線維性骨異形成症と比較してX線透過性が強く、その不透過性も均一なものではなく、X線透過像の中に、大小のX線不透過像が混在する、いわゆる mottled appearance (斑紋様所見) を呈するものが多い⁵⁾。これら両者の相異点を考慮に入れて、われわれは、本症例を線維性骨異形成症であると診断した。

線維性骨異形成症が多骨性であるか単骨性であるかの鑑別は、これまでの報告のほとんどが、全身のX線検査のみによって成されているのが実情であるといえる^{6,7)}。しかし、骨病変の変化がX線写真上に現れるためには、少なくとも30%

内外のCa量の変化が必要であるとされており、初期の骨病変においては、X線検査のみでは判定が不可能なことが多々認められる^{2,4)}。従って、これまで単骨性線維性骨異形成症として報告されたものの中に、実は多骨性線維性骨異形成症であったものが含まれていると考えられる。

本学歯学部附属病院放射線科では、このようなX線検査の欠点を補う意味で、線維性骨病変の診断時には、必ず^{99m}Tc-MDPによる骨シンチグラフィーを行うことを原則とし、より早期の鑑別を核医学的に行っている。

骨シンチグラフィーの利点は、投与した骨親和性放射性医薬品がトレーサーとして骨の代謝経路に入り、CaやPの代謝に変化がある部位に集積してγ線を放出するので、X線写真に現れない、極めて初期の骨疾患を形態的に検出できることである^{2,4)}。また、同時に、機能的変化や生化学的変化をも推測することが可能であるとともに、X線検査を繰り返すよりも被曝線量が極めて少ないことや1回の投与で何枚ものシンチグラムが得られることなどの理由から、全身の骨格系の検索に、骨シンチグラフィーは欠かせないものであると言える。われわれが経験した症例においても、全身の骨格系の検査は、^{99m}Tc-MDPによる骨シンチグラフィーのみであり、X線検査の必要性は全く認められなかった。

文献的に見ると、現在のところ、歯学領域における線維性骨病変の検索に、骨シンチグラフィーが行われたとの報告は極めて少ない。ここ数年では、東ら(1980)⁴⁾およびHigashiら(1980)⁸⁾による報告が認められる程度であった。しかし、今後は、歯学領域での核医学施設の充実に伴って、骨シンチグラフィーを利用する頻度がより高くなるものと考えられる。

一方、線維性骨異形成症の分類についてであるが、Lichtenstein (1938)⁹⁾は、多骨性の骨髄性線維性病変で、かつアルブライト症候群に見られるような皮膚の色素沈着や性的早熟を伴わ

ない線維性の病変を polyostotic fibrous dysplasia の名称で報告した。その後, Lichtenstein and Jaffe (1942)¹⁰⁾ は, 単一の骨のみに発現する線維性骨異形成症も認められることを報告し, これら両者をまとめて fibrous dysplasia of bone という名で呼び, これを多骨性線維性骨異形成症 (polyostotic fibrous dysplasia) と単骨性線維性骨異形成症 (monostotic fibrous dysplasia) の2型に分類した。これまでのところ, 種々の分類法が提唱されているが, アルブライツ症候群, 多骨性線維性骨異形成症, 単骨性線維性骨異形成症の3型に分けるのが最も適しているものと考えられる。

結 論

われわれが経験した単骨性線維性骨異形成症の症例を供覧するとともに, 線維性骨病変の診断に用いた骨シンチグラフィーについて簡単に考察を加えた結果, 以下の結論を得た。

1) 本症例は上顎右側臼歯部に限局して発現した単骨性線維性骨異形成症であった。

2) 全身骨の検索には ^{99m}Tc-MDP による骨シンチグラフィーを用いたが, 頭顔部を除き, 異常所見は全く認められなかった。従って, 頭顔部以外のX線検査は全く不必要であった。

3) 全身骨の初期の病変の検索には, X線検査を繰り返すよりも, 被曝線量の点から考えて, 骨シンチグラフィーの方がより有意義であるものと考えられた。

参 考 文 献

1. 石川梧郎: 非歯原性腫瘍, 石川梧郎監修: 口腔病理学Ⅱ, 546~553, 永未書店, 京都, 1982.
2. 金子昌幸: ^{99m}Tc-pyrophosphate による骨スキャニングの分析結果について, 歯学, 67; 565-578, 1979.
3. 古本啓一, 金子昌幸: ラジオアイソトープ(RI)の臨床的应用, 日歯医会誌, 31; 962-972, 1978.
4. 東 与光, 若尾博美, 志村 彰, 古川恵司: 核医学の歯科における進歩, 歯科ジャーナル, 12; 63-74, 1980.
5. 今井一彦: 硬組織形成を伴う顎の良性線維性疾患についての臨床的, エックス線のならびに病理組織学的研究, 岐歯学雑誌, 5; 68-97, 1977.
6. 立川 潤, 市川泰右, 大根光朝, 山根 瞳, 下野正基, 河原裕憲: 下顎骨に発生した Monostotic fibrous dysplasia の1例, 口外誌, 17; 334-339, 1971.
7. 清水和幸, 日比五郎, 河合男, 岡 達: Albright 症候群を完備した1例を含む, Polyostotic fibrous dysplasia の3例, 口外誌, 19; 741-748, 1970.
8. Higashi, T., Iguchi, M., Shimura, A. and Kruglik, G.O.: Computed tomography and bone scintigraphy in polyostotic fibrous dysplasia, Oral Surg., 50; 580-583, 1980.
9. Lichtenstein, L.: Polyostotic fibrous dysplasia, Arch. Surg., 36; 874-893, 1938.
10. Lichtenstein, L. and Jaffe, H. L.: Fibrous dysplasia of bone, Patho., 33; 777-816, 1942.